

Title	小児精巣卵黄嚢腫瘍の2例
Author(s)	三上, 修; 森, 博明; 吉田, 良; 内田, 潤二; 松田, 公志; 小松, 洋輔
Citation	泌尿器科紀要 (1992), 38(4): 469-473
Issue Date	1992-04
URL	http://hdl.handle.net/2433/117521
Right	
Type	Departmental Bulletin Paper
Textversion	publisher

小児精巣卵黄囊腫瘍の2例

関西医科大学泌尿器科学教室 (主任: 小松洋輔教授)

三上 修, 森 博明, 吉田 良
内田 潤二, 松田 公志, 小松 洋輔YOLK SAC TUMOR OF THE TESTIS IN CHILDREN:
REPORT OF TWO CASESOsamu Mikami, Hiroaki Mori, Ryou Yoshida,
Junji Uchida, Tadashi Matsuda and Yousuke Komatz
From the Department of Urology, Kansai Medical University

Two cases of yolk sac tumor of the testis are presented. The patients were 17 months and 24 months old. The children were inflicted with painless swelling of their left scrotal content. α -Fetoprotein levels were elevated at presentation but decreased within normal limits after orchiectomy. Chest X-rays and CT scans were negative. The cases were diagnosed as stage I.

Fifty six cases of testicular yolk sac tumor in children have been reported in Japan since 1981. There were no recurrent stage I cases. One patient with stage II and 3 patients with stage III died despite chemotherapy, while three children with stage II or stage III disease survived more than 36 months after a positive response to chemotherapy.

We conclude that prepubertal stage I yolk sac tumor is treated best initially by orchiectomy alone. Aggressive chemotherapy has a major role in salvage of stage II or stage III patients.

(Acta Urol. Jpn. 83: 469-473, 1992)

Key words: Yolk sac tumor, Testicular tumor in children

緒 言

小児精巣腫瘍は全精巣腫瘍の16%程度を占めるが¹⁾ そのうちの80%が卵黄囊腫瘍 (yolk sac tumor: YST), 20%が成熟奇形腫である²⁾。

卵黄囊腫瘍は1959年に Teilum が提唱した概念であり³⁾, 発生学的には胎児外成分的要素からの悪性化 (extra embryonal elements tumor) が yolk sac の形成方向におこったものと考えられている⁴⁾。

組織学的には, ①cystic pattern ②loosed vacuolated mash work ③ perivascular structure (Schiller-Duval body) などの要素が観察され⁴⁾, さらに免疫組織学的に血管周囲に AFP が証明されることを特徴とする⁵⁾。

今回われわれは, 精巣卵黄囊腫瘍の2例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

症例1

患者: 1歳5カ月

主訴: 左陰囊内容の無痛性腫大

現病歴: 1990年9月ごろより両親が左陰囊内容の腫大に気付いていたが, 無痛性のため放置していた。同年12月になり, 腫大が顕著になり来院した。

現症: 体格, 栄養中等度。胸腹部に異常を認めない。表在性リンパ節を触知しない。左陰囊内にクルミ大の腫瘤を認めた。腫瘤は表面整, 弾性硬で透光性はなく, 超音波検査で充実性腫瘍と診断した。

検査成績: 末梢血液像: 異常なし。血液生化学: 異常なし。腫瘍マーカー: AFP 23062 ng/ml, hCG- β 0.23 ng/ml, CEA 2.9 ng/ml と AFP の異常高値を認めた。胸腹部X線検査: 異常所見なし。

入院後経過: 左精巣腫瘍の診断下, 1990年12月28日, 左高位精巣摘除術を施行した。摘除標本所見: 腫瘍は 29×27 mm, 重量は 16.2 g 断面は黄色充実性で出血, 壊死を認めず白膜への浸潤は認めなかった。

病理組織所見: 異型上皮性細胞が全体的に管腔を形成し (tubular pattern) 一部は細網状となり充実性

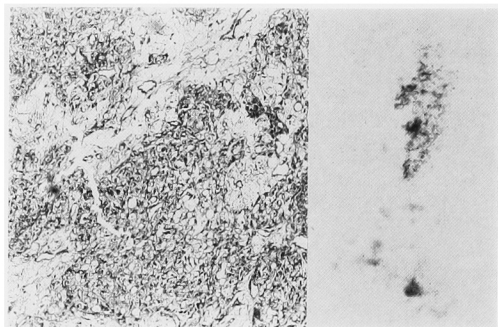


Fig. 1

Fig. 2.

Fig. 1. Histological findings of the testicular yolk sac tumor (case 1). H&E ×100

Fig. 2. Immunofluorescence staining for AFP within the tumor cells. (case 1). ×400

に増殖していた (Fig. 1).

また Schiller-Duval body と思われる構造も認められた。

免疫組織学的には AFP が顆粒状に陽性所見を呈する腫瘍細胞も認められた (Fig. 2).

症例 2

患者：2歳0カ月

主訴：左陰嚢内容の無痛性腫大

既往歴：1歳5カ月時、先天性水頭症のため VP シャント術を受けた。

現病歴：1991年1月4日脳神経外科受診時に左陰嚢内容の腫大を指摘され、当科を受診した。陰嚢内容は両側ともに弾性軟で透光性を有し、両側性陰嚢水腫と診断され経過観察されていた。8月になり、左陰嚢内容の急速な増大を認め左精巣腫瘍の疑いで入院となった。

現症：体格、栄養中等度。胸腹部は VP シャント術の術創を認める以外異常を認めない。表在性リンパ節を触知しない。左陰嚢内に「クルミ大」の腫瘤を認めた。腫瘤は表面不整、弾性硬で境界は明瞭、透光性は認めなかった。

検査成績：末梢血液像：異常なし。血液生化学：異常なし。腫瘍マーカー：AFP 5823 ng/ml, hCG-β 0.13 ng/ml と AFP の異常高値を認めた。胸腹部 X線検査：異常所見なし。

入院後経過：左精巣腫瘍の診断下で1991年8月9日、左高位精巣摘除術を施行した。

摘除標本所見：腫瘍は 28×25 mm, 重量は 16.5 g, 断面は黄色充実性で出血、壊死を認めず、ほとんどが腫瘍組織で占められていた。白膜への浸潤は認めなかった。

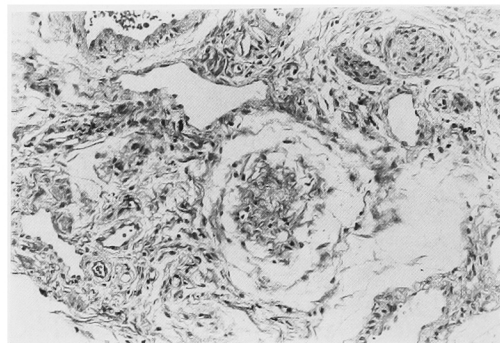


Fig. 3. Schiller-Duval body. (case 2). H&E ×200

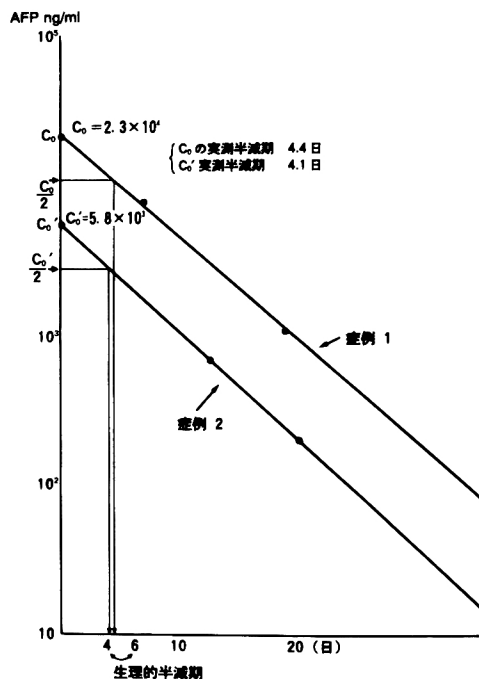


Fig. 4. Measured half life of AFP

病理組織所見：類円形でクロマチン粗な核を有し、1～2個の核小体を含む腫瘍細胞を認めた。間質はところどころで myxoid となり、細胞内外に好酸性の硝子滴を含んでいた。また Schiller-Duval body も認められた (Fig. 3)。

術後経過：いずれの症例も経過は順調で術後7日前後で退院した。術後に行った腹部 CT で肝、後腹膜リンパ節などに異常を認めなかった。術後 AFP は順調に低下し、グラフより実測半減期を求めると⁶⁾、4.1～4.4日となった (Fig. 4)。AFP の半減期は4～6日であり、実測半減期を求めこれと比較することは stage の決定に有用であった。

Table 1. Clinical findings of testicular YST in infants (1981~1991)

1. 全症例数56例 (患児年齢3か月~60か月 平均年齢15.7か月)
 2. stage, 予後の判明している50症例の分類

	短期観察群(15M以内)23例			長期観察群(15M以上)27例		
	生存	死亡	再発	生存	死亡	再発
stage I	15	—	1	23	—	—
stage II	3	1	—	1	—	—
stage III	1	2	—	2	1	—

3. 上記50症例の治療内容

	・短期観察群 23例			
	O	O+RPND	O+C	O+RPND+C
stage I	11	—	3	2
stage II	—	—	1	3
stage III	—	—	3	0

	・長期観察群 27例			
	O	O+RPND	O+C	O+RPND+C
stage I	11	8	4	—
stage II	—	—	1	—
stage III	—	—	3	—

O orchidectomy
 RPND: retroperitoneal lymph node dissection
 C chemotherapy

以上より精巣卵黄囊腫瘍 stage I の2症例と診断した。

考 察

1990年に西村らが⁷⁾ わが国における1981年以降の精巣卵黄囊腫瘍の症例をまとめているがそれ以外の追加症例と自験例をあわせた56例をまとめた⁸⁻¹³⁾ (Table 1). (文献14)と15)は同一症例と思われ1症例とした.)

患児は3月から60か月で平均年齢は15.7か月であった。予後と stage の判明しているものは50例であり, stage I が39例 stage II が5例 stage III が6例であった。この50例について検討してみた。

卵黄囊腫瘍の場合初期治療から14か月以降の再発はない¹⁶⁾ との理由から15か月以上 follow up できた群 (長期観察群) と14か月以下の follow up 群 (短期観察群) に分けて検討してみた。

再発は, 滝, 寺地らによって計3回にわたり報告された症例¹⁷⁾ の1例のみであった。

しかしながら, この症例は卵黄囊腫瘍の特徴的な病理所見に乏しく, 当初血清 AFP も陰性であったことから, 例外的な症例と考えてよいと思われる。よって, この症例を除けば再発例は1例もなく stage I では follow up 期間が長期でも短期でも全例再発なく生存していた。また stage II では5例中4例が生存,

stage III では6例中3例が生存していた。

従来より卵黄囊腫瘍では2歳までと2歳以後で予後に差があり, 2歳までの症例は予後が良いといわれてきた¹⁸⁾。しかしながら, 1988年に Kaplan ら¹⁶⁾は両者間に有意差はなかったと報告した。今回の検討では50例中2歳以降の症例は3例のみで両群間での比較はできなかった。2歳以降の3症例のうち長期観察の症例は, 岡本の報告例¹²⁾であるが, stage III であったが CISCA を計2年間9クール行い治療終了後3年間健在である症例である。

死亡例は stage II の1例, stage III の3例の計4例であり, いずれも化学療法が奏功せず不幸な転帰をとったものである。また死亡例4例のうち3例が発見より15か月以内に死亡している。しかしながら stage II stage III で化学療法の奏功した症例3例は36か月, 43か月, 60か月間再発なく生存しておりいずれも完治したと考えられた。

以上から卵黄囊腫瘍の症例では stage I の場合は予後がよく stage II や stage III の場合は化学療法が奏功すれば治癒できうと思われる。すなわち卵黄囊腫瘍の予後は stage と初期化学療法に対する反応によって決定されるといえるのではないだろうか。

血清 AFP に関しては, 記載のあった41例中正常であったものは2例であり残りの39例では上昇していた。実測値の示された22例では, 進行例が必ずしも高値とは限らなかった。

治療に関しては Table 1 に示す通りであるが, stage I で精巣摘除のみで長期観察を行った11例は全例再発なく経過している。

近年の報告¹⁶⁾でも, stage I において精巣摘除のみを行った群と, それ以外の治療を追加した群との間に予後に有意差を認めなかったとしており, このことから stage I に関しては精巣摘除のみで経過観察を行ってよいと考える。

諸家の報告を集計すると, リンパ節転移は約10%程度に認められる¹⁹⁾。現在のように化学療法が確立する以前では, リンパ節郭清の有効性を報告する文献も見られた²⁰⁾。しかしながら従来より卵黄囊腫瘍は血行性転移が起こりやすいとされており²¹⁾, 実際に stage I に対して行った予防的リンパ節郭清の結果は, ほとんどの症例が陰性であったとする報告が多い^{16,21,22)}。また最近ではリンパ節転移に対しても, 化学療法が有効であったとするものが多く^{16,22,23)}, 郭清に伴う術中, 術後の合併症を考慮すると stage I に対しての予防的リンパ節郭清は不要, stage II に対しても, 化学療法を優先すべきと考える。

化学療法に関しては、従来より VAC 療法が広く行われており、salvage rate も 50%以上となっている¹⁶⁾。腎機能の未熟な小児に対して、high dose の CDDP の使用は適当でないとする意見もあるが²⁴⁾、わが国でも CDDP による著効例の報告があり^{9,17,25)} CDDP を含んだ regimen の使用も考慮すべきである。岡本ら¹²⁾は CDDP, CPM, ADM を含むような regimen で治療を行った 4 症例を報告しているが、治療後に腎障害等を認めたという記載がないことから一応の目安になろう。

前述のように、stage II に対しては、リンパ節郭清よりも化学療法を優先させるべきである。もし化学療法のみでリンパ節の縮小が認められなければ、リンパ節郭清も考慮すべきである。stage III に対しては化学療法を中心に集学的治療の対象となる。肝転移等に対しては化学療法の有効例の報告が少ないので、転位巣切除の考慮も必要となろう。また quality of life を前提にした外科治療、放射線療法の可能性もある。

結 語

1 歳 5 カ月、2 歳の精巣卵黄嚢腫瘍の 2 例を報告した。過去 10 年間の報告例 56 例を検討した結果、stage I では全例再発なく、精巣摘除および経過観察でよいと思われた。stage II, stage III では化学療法により完治した症例もあり、化学療法を優先させるべきと思われた。

なお、本論文の要旨は第 134 回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 吉田 修, 桐山菅夫, 宮川美栄子, ほか: 1970 年代の日本人睾丸(精巣)腫瘍の臨床統計. 泌尿紀要 **31**: 337-356, 1985
- 手島伸一, 大里幸雄, 清水興一. ほか: 小児の胚細胞腫瘍の病理. 病理と臨床 **3**: 389-394, 1985
- Teilum G: Endodermal sinus tumors of the ovary and testis. Cancer **12**: 1092-1105, 1959
- 大田黒和生: 小児期の精巣腫瘍. 泌尿器外科 **2**: 1007-1012, 1988
- Teilum G: Immunofluorescent localization of alpha-fetoprotein synthesis in endodermal sinus tumor (yolk sac tumor). Acta Pathol Microbiol Scand Sect A **82**: 586, 1974
- Lo RK and Johnson DE: A graphical method to analyze serum tumor marker decay in nonseminomatous testis tumors. J Urol **131**: 896-898, 1984
- 西村和郎, 谷内一郎, 吉村一宏, ほか: 小児精巣 Yolk Sac Tumor の 1 例. 西日泌尿 **52**: 1435-1438, 1990
- 青柳貞一郎, 長倉和彦, 藤岡俊夫, ほか: 睾丸腫瘍 31 例の治療経験. 防医大誌 **11**: 35-39, 1986
- 有吉宣明, 朝倉昭雄, 中村外士雄, ほか: 当科で経験した yolk sac carcinoma 5 症例の検討. 小児臨床 **40**: 3139-3145, 1987
- 島田 修, 津田暢夫, 井関充及, ほか: 睾丸腫瘍の臨床病理学的研究—長崎大学病院および関連病院の睾丸腫瘍 81 例の再検討. 臨床と病理 **5**: 1229-1236, 1987
- 多田 実, 武村 聡, 新井律夫, ほか: 小児精巣腫瘍 5 症例の臨床的検討. 埼玉医学会誌 **24**: 366-371, 1989
- 岡本英一, 谷風三郎, 吉野 薫, ほか: 小児精巣卵黄嚢癌の臨床的検討. 日小児外会誌 **25**: 60-63, 1989
- 福永良和, 高橋真一, 河野信一, ほか: 転移をみた小児睾丸卵黄嚢腫瘍の 1 例. 西日泌尿 **52**: 325-329, 1990
- 森川文雄, 与儀実夫, 小野寺恭忠, ほか: 幼児睾丸腫瘍の 1 例. 日泌尿会誌 **78**: 385, 1987
- 佐川文明, 太田秀一: 睾丸 Yolk sac tumor の 1 例. こども医療センター医学誌. **16**: 48, 1987
- Kaplan GW, Cromie WC, Kelalis PP, et al.: Prepubertal yolk sac testicular tumors-Report of the testicular tumor registry. J Urol **140**: 1109-1112, 1988
- 寺地敏郎, 大森孝平, 滝 洋二, ほか: 腫瘍切除と化学療法にて治療せしめた再発せる小児睾丸卵黄嚢腫の 1 例. 泌尿紀要 **31**: 507-516, 1985
- Brosman SA: Testicular tumors in prepubertal children. Urology **13**: 581-588, 1979
- Bracken RB, Johnson DE, Cangir A, et al.: Regional lymph nodes in infants with embryonal carcinoma of testis. Urology **11**: 376-379, 1978
- Staubitz WJ, Jewett TC, Magoss IV, et al.: Management of testicular tumor in children. J Urol **94**: 683-686, 1965
- Young PG, Mount BM, Foote FW, et al.: Embryonal adenocarcinoma in the prepubertal testis. Cancer **26**: 1065-1075, 1970
- Griffin GC, Raney JR RB, Snyder HMcC, et al.: Yolk sac carcinoma of the testis in children. J Urol **137**: 954-957, 1987
- Homsy Y, Arrojo-Vila F, Khoriaty N, et al.: Yolk sac tumor of the testicle: Is retroperitoneal lymph node dissection necessary? J Urol **132**: 532-536, 1984
- Exelby PR: Testicular cancer in children. Cancer **45**: 1803-1809, 1980
- 宮野孝一, 須藤善雅, 伊東亮助, ほか: シスプラチンを中心とした多剤併用療法 (PVB 療法) を

行った睾丸胎児性癌の3症例. 小児がん 23 :
215-217, 1987

(Received on November 15, 1991)
(Accepted on January 9, 1992)
(迅速掲載)